

협부 피하층에 발생한 성숙한 해면골의 증례보고

장효원¹⁾, 윤태균¹⁾, 이바다¹⁾, 최은주¹⁾, 차용훈²⁾, 김현실^{2)*}

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실¹⁾, 구강병리학교실, 구강종양연구소²⁾

〈Abstract〉

A Case Report of Mature Cancellous Bone in Cheek Subcutaneous Tissue

Hyo Won Jang¹⁾, Tae Gyun Youn¹⁾, Ba Da Lee¹⁾, Eun Ju Choi¹⁾, Yong Hoon Cha²⁾, Hyun Sil Kim^{2)*}

Department of Oral and Maxillofacial Surgery¹⁾,

Department of Oral Pathology, Oral Cancer Research Institute²⁾, College of Dentistry, Yonsei University

Whereas calcium deposition in soft tissues is not uncommon, highly-structured, identified as mature cancellous bone within soft tissues is not frequent. Here, we report an usual case of mature cancellous bone in cheek subcutaneous tissue in 15-year-old Korean male. Microscopically the cancellous bone was encompassed by epithelial cells, which was confirmed by immunohistochemical staining with cytokeratin AE1/3. The present mature cancellous bone in subcutaneous tissue could be originated from oral epithelium.

Key words : Calcification, Ossification, Subcutaneous tissue, Cytokeratin AE1/3, Immunohistochemistry

I. 서론

피부 골화(cutaneous ossification)는 원발성으로 나타나는 피부 골종(osteoma cutis)과, 이차성으로 나타나는 화생성 골화(metaplastic ossification)으로 분류된다.

피부 골종은 기존의 병소나 관련된 병소 없이 원발성으로 나타나지만, 화생성 골화는 염증, 외상, 혹은 종양 등의 발생 후에 이차적으로 발생한다.

피부 골종(osteoma cutis)은 진피 혹은 피하층에서 이소성(heterotopic)으로 발견되는 다양한 크기의 성숙한 골편으로, 신체 어느 부위에서도 발생 가능하지만 주로 안면부에 호발한다¹⁾.

화생성 골화는 알브라이트 유전성 골이영양증(Albright's hereditary osteodystrophy)과 같은 전신 질환에서 발생한다. 알브라이트 유전성 골이영양증은 부갑상선(parathormone)에 대한 조직반응이 부족해서 발생하는 유사부갑상선기능저하증(pseudohypoparathyroidism)으로, 일부 환자에서는 저칼슘혈증(hypocalcemia)가 발생한다.

본 연구에서는 이차적 화생성 골화에서 관찰되는 전신질환의 임상적 특징이 없고, 원발성 피부 골종과는 다른 특징적인 조직병리 특징을 보였던 협부 피하층의 골화성 병소의 증례를 보고하고자 한다.

II. 증례보고

2012년 4월, 15세 남자 환자가 교통 사고로 발생한 우측 관골 상악 복합체 골절에 대한 평가와 치료를 위해 타 대학 병원 응급실로부터 본원 구강악안면외과로 의뢰되었다.

* Correspondence: Hyun Sil Kim, Department of Oral Pathology, Oral Cancer Research Institute, College of Dentistry, Yonsei University, 250 Seongsanno, Seodaemun Gu, Seoul, Korea
Tel: +82-2-2228-3033, Fax: +82-2-392-2959, E-mail: khs@yuhs.ac

* Acknowledgements: 본 연구는 보건복지가족부 암정복추진연구개발사업 지원으로 이루어진 것임 (1020110).

Received: Sep 21, 2012; Revised: Sep 26, 2012; Accepted: Sep 28, 2012

3차원 전산화 단층 촬영 결과, 우측 관골 및 우측 하악골 근육돌기(coronoid process)의 골절과 함께 우측 협부 피하층에 구형의 비교적 경계가 명확한 직경 5mm 가량의 석회화 조직이 관찰되었다(Fig. 1).

환자는 특기할 만한 전신 질환 및 수술, 외상 등의 과거력은 없었으며, 오래 전부터 우측 협부에 미약한 경결감이 있었다고 하였다.

환자의 일반 혈액검사 및 화학검사 결과 모두 정상이었으며, 특히 혈중 칼슘 농도는 9.1(정상: 8.5-10.5 mg/dl), 인산염 농도는 3.7(정상: 2.5-4.5 mg/dl)로 정상 수치였다.

전신 마취 하에 환자의 관골 골절 부위에 대한 관혈적 정복술을 시행함과 동시에 구내 접근법으로 협부 피하층 병소를 절제하였다. 병소는 주변부와 경계가 명확하였고 제거된 조직은 매우 단단하였다.

조직검사 결과 hematoxylin-eosin 염색에서 표피 하방으로 성숙한 해면골이 관찰되고, 골조직 둘레를 퇴화된 이소성 조직이 둘러싸고 있었다. 또한 골조직 주변으로 입방형 세포로 이루어진 섬(islands)과 끈(strands) 형태도 관찰되었다. 이소성 조직에 대한 cytokeratin AE1/3 면역 화학 염색에서 양성 반응을 보여, 이소성 조직은 상피로 판별되었다(Fig. 2).

이상의 조직병리학적 소견을 바탕으로 본 병소는 이소성 상피 조직에서 발생한 특발성(idiopathic) 골화 조직으로 최종적으로 진단하였다.

III. 고찰

조직병리학적으로 피부 골종은 피부 외피 하방으로 골조



Fig. 1. A, B. Axial view of pre-operative computed tomography(CT) shows relatively well-defined spherical shaped hard tissue mass(arrow) in the subcutaneous layer of the right buccal cheek, C, D. Coronal view of CT shows hard tissue mass(arrow) on right zygomatic arch level.

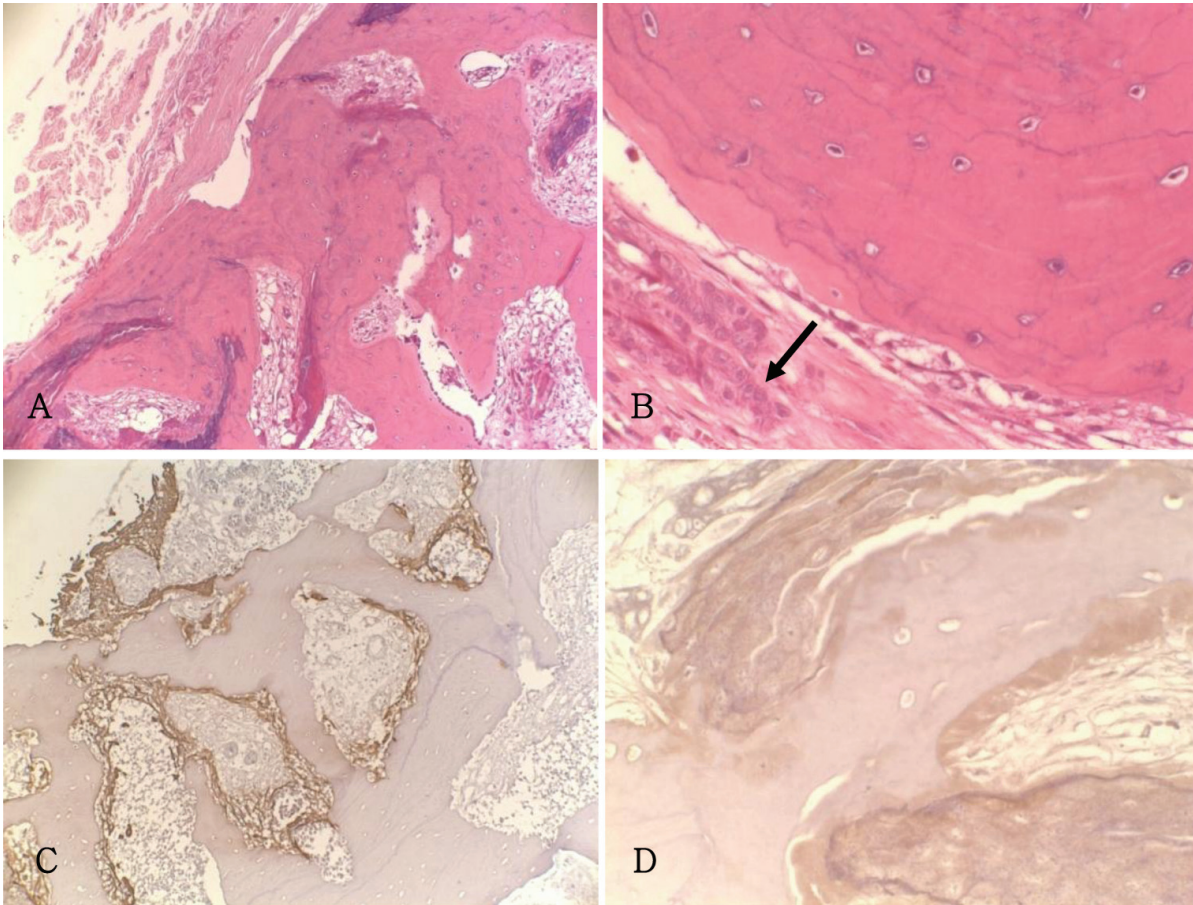


Fig. 2. **A.** Microscopic features of the lesion demonstrate mature cancellous bone surrounded by epithelial cells, **B.** The cancellous bone display lamellar structure, and contains osteocytes. Multiple small strands of cuboidal epithelium (arrow) are also identified. **C, D.** Immunohistochemical stain with cytokeratin AE1/3 reveal the epithelial cells along the periphery of the bone.

직을 포함하고 있으며, 본 증례에서 보이는 것처럼 골조직 주변에 상피조직을 포함하고 있는 경우는 보고된 바 없다.

대표적인 이차성 골화 병소인 알브라이트 유전성 골이영양증의 경우, 저칼슘혈증이 동반될 수 있음에 비해 본 증례의 환자는 정상 수치를 보였으며, 알브라이트 유전성 골이영양증에서 관찰되는 저신장, 둥근 안모(round face), 양측성 단지증(brachydactyly), 짧은 중수골 및 중족골(short metacarpal/metatarsal bone), 이차성징 결핍, 지능저하 등의 임상 소견은 관찰되지 않았다.

그 외 이차성 골화 병소로 모반(nevus), 기저세포암(basal cell carcinoma), 모기질종(pilomatrixoma) 등에서 동반되는 피부 골화성 병소가 있다. 그러나 본 증례에서 관찰되는 상

피는 종양성 성장을 하지 않았으며, 상피조직 주변에 골조직 외에 다른 동반된 종양의 소견은 없었다.

상피세포가 골형성을 유도하는 경우로는 주로 전립선암의 전이성 병변에서 주로 나타나며, 유방암 및 타액선 종양의 전이성 병변에서도 보고되고 있다. 전립선암에 의한 골형성능은 전립선 특이항원(PSA, prostate specific antigen)에 의한 parathyroid hormone-related protein(PTHrP)의 조절에 의한 것으로 보고되고 있다²⁾. 그러나, 이러한 상피성 종양에 의한 골형성은 본 증례에서처럼 골조직 주변으로 상피가 둘러싸고 있는 양상이 아니라, 기질 부위에서 골형성이 나타나는 양상을 보인다.

상피세포에 의한 석회화 유도 현상의 예로는 치성 상피에

의한 석회화를 들 수 있다. 석회화 치성낭(calcifying odontogenic cyst), 석회화 상피성 치성 종양(calcifying epithelial odontogenic tumor) 등에서 치성 상피에 의한 석회화 유도는 흔히 관찰되지만^{3),4)}, 치성 상피에 의한 골화 병소는 알려진 바 없다. 또한 본 증례의 병소를 치성 상피에서 기원한 것으로 판단하기에는 tooth-bearing area와 해부학적으로 멀리 떨어져 있으며, 잔존 치성 상피에 의한 골화 병소에 대해 알려진 증례가 없지만 가능성을 완전히 배제할 순 없었다.

피하층 칼슘 침착의 원인은 이영양성, 전이성, 특발성, 의인성 크게 4가지로 분류된다⁵⁾. 일반적으로 피하 칼슘 침착은 연조직 손상에 의한 칼슘 침착 및 체내 칼슘, 인산염 농도를 증가시키는 전신 질환에 의한 칼슘 침착이 대부분이지만 드물게 특발성, 외인성으로 피부층 혹은 피하층의 칼슘 침착이 나타날 수 있다⁵⁾. 칼슘 침착의 정도에 따라 기능 및 감각 이상 등 여러 가지 임상적 증상이 나타날 수 있으며, 일차적인 칼슘 침착은 주로 이차적인 골화 과정으로 진행된다⁵⁾. 본 증례의 경우, 환자의 특기할 만한 전신 병력이 없었고 이학 검사 결과 정상적인 칼슘, 인산염 수준을 보였으며 약물 주입이나 외상의 병력이 없어 원발성 골화 병소로 판단하며, 특발성으로 진행되었다고 생각한다. 그러나 일반적인 원발성 골화 병소인 피부 골종과는 달리 골조직 주변으로 상피조직이 관찰되고 있어, 치성상피 기원의 골화성 병소의 가능성을 완전히 배제할 수 없다고 생각한다.

최근 경조직 재생에 대한 관심이 증가되고 있는 상황에서 이와 같은 특발성, 이소성 양성 경조직 병소의 발생은 향후 경조직 재생 연구에 단서를 제공할 수 있을 것이다.

IV. 참고 문헌

1. Farhood V, Osteoma cutis: Cutaneous ossification with oral manifestations, Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1978;45:98-103.
2. Roodman G D: Mechanisms of bone metastasis, N Engl J Med 2004;350:1655-1664.
3. Jones, J. Calcifying epithelial odontogenic and keratinizing odontogenic tumors, Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1968;25:465-469.
4. Sigel J. Immunohistochemical analysis of anaplastic lymphoma kinase expression in deep soft tissue calcifying fibrous pseudotumor: Evidence of a late sclerosing stage of inflammatory myofibroblastic tumor? Ann Diagn Pathol 2001;5:10-14.
5. Walsh J. Calcifying disorders of the skin, J Am Acad Dermatol 1995;33:693-706.